

冠突过长:一种伪装成颞下颌关节疾病的罕见病



扫码阅读电子版

廖文婷 何一青 孙佳栋 孙养鹏 张志光

中山大学附属口腔医院, 光华口腔医学院, 广东省口腔医学重点实验室, 广州 510055

通信作者: 张志光, Email: drzhangzg@163.com



张志光

【摘要】 冠突过长是一种下颌骨冠突异常骨性增生疾病, 其临床表现多为进行性的无痛性张口受限。冠突过长在临床上罕见, 因此误诊率较高。本文将对冠突过长的发病情况、病因、诊断及治疗进行相关文献的概括和总结。

【关键词】 冠突过长; 张口受限; 研究进展

引用著录格式: 廖文婷, 何一青, 孙佳栋, 等. 冠突过长: 一种伪装成颞下颌关节疾病的罕见病[J/CD]. 中华口腔医学研究杂志(电子版), 2021, 15(1): 1-5.

DOI: 10.3877/cma.j.issn.1674-1366.2021.01.001

Coronoid process hyperplasia: A rare disorder masquerading as temporomandibular joint disease

Liao Wenting, He Yiqing, Sun Jiadong, Sun Yangpeng, Zhang Zhiguang

Hospital of Stomatology, Guanghua School of Stomatology, Sun Yat-sen University, Guangdong Provincial Key Laboratory of Stomatology, Guangzhou 510055, China

Corresponding author: Zhang Zhiguang, Email: drzhangzg@163.com

【Abstract】 Coronoid process hyperplasia (CPH) is defined as an abnormal elongation of the mandibular coronoid process consisting of histologically normal bone. It is a rare condition causing a slow, progressive reduction of mouth opening. Because of its low incidence, it is easy to be misdiagnosed. This review was to summarize the literature on the pathogenesis, etiology, diagnosis and treatment of coronoid process hyperplasia.

【Key words】 Coronoid process hyperplasia; Reduction of mouth opening; Research progress

DOI: 10.3877/cma.j.issn.1674-1366.2021.01.001

一、概述

颞下颌关节是由固定的颞骨和活动的下颌骨组成, 它是可进行复杂功能运动的关节。冠突是下颌骨上除了髁突以外的另一个突起。冠突作为颞肌及部分咬肌的骨性附着, 并不参与关节的运动。多数冠突的形状是三角形(49%~67%), 其次是钩形(21%~30%), 少部分是圆形(3%~24.58%)。冠突的长度为13.9~15.3 mm, 其长度与性别无关。冠突过长(coronoid process hyperplasia, CPH)是一种下颌骨冠突异常骨性过长的疾病, 病理为正常的冠突结构, 并排除由骨瘤、骨软骨瘤等引起的冠突增生^[1]。冠突过长的临床表现多为进行性的无痛性张口受限及面部畸形^[2]。目前渐有文献报道, 尽管如此, 冠突过长在临床上还是很罕见的。因此, 临床上容易与颞下颌关节紊乱病混淆, 误诊率较高。故本文将对冠突过长的发病情况、病因、诊断及治疗作一总结。

典型病例 患者, 男, 54岁, 因“渐进性张口受限20余年”于中山大学附属口腔医院就诊。检查: 颜面部对称, 双侧颞下颌关节活动度减弱, 无弹响、无压痛, 开口度0.2 cm(图1A)。全颌曲面断层片及锥形束CT(cone-beam computed tomography, CBCT)检查: 右侧冠突过长, 形态异常且较左侧大, 左侧冠突过长(图1B)。双侧髁突未见骨质破坏, 关节间隙正常。初步诊断: 双侧冠突过长。治疗方案: 手术切除双侧冠突。手术过程: 分别沿36、46颊侧前庭沟至双侧翼颌韧带作切口, 翻开黏骨膜瓣暴露双侧冠突, 切断右侧冠突基部后辅以右颞弓切开术, 取出右侧冠突(图1C)。右侧颞弓切断处用钛板作颞弓复位内固定术。切除右侧冠突后张口度达2.0 cm(图1D), 切除左侧冠突后(图1E)张口度达4.0 cm(图1F)。术后病理示正常骨小梁结构, 考虑为双侧冠突增生。术后患者恢复良好, 出院后嘱患者张口

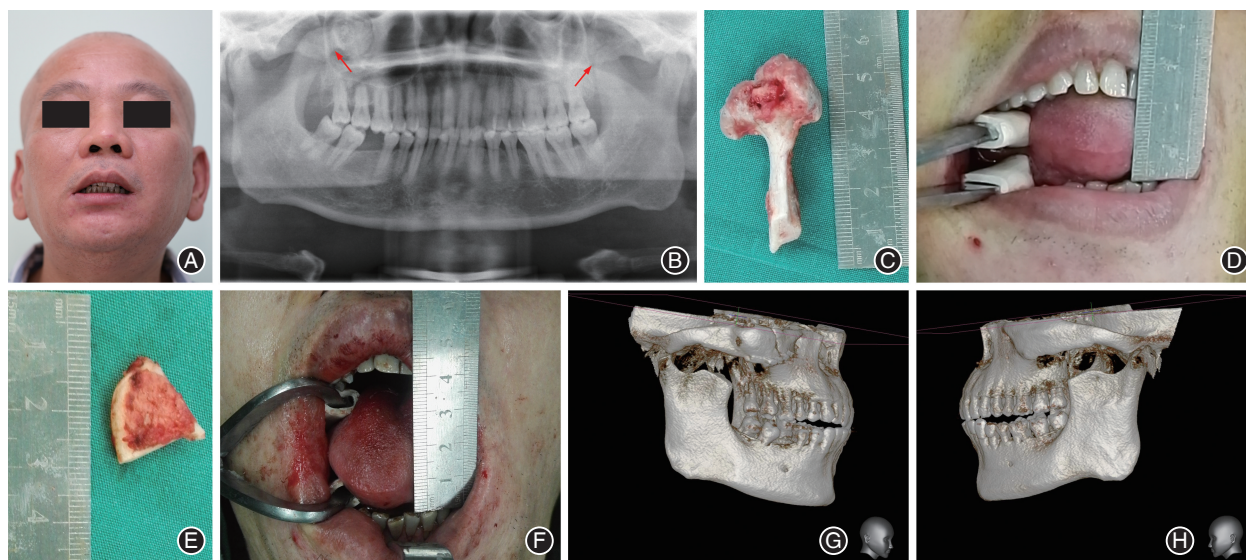


图1 冠突过长典型病例治疗前后图片资料 A:手术前张口完全受限;B:术前全颌曲面断层片,箭头示右侧冠突形态异常、左侧冠突增长;C:手术切除的右侧冠突;D:手术切除右侧冠突后,术中被动张口度2.0 cm;E:手术切除的左侧冠突;F:切除左侧冠突后,术中被动张口度为4.0 cm;G:术后1年复查锥形束CT(CBCT)示右侧冠突已被切除;H:术后1年复查CBCT示左侧冠突已被切除

训练。术后1年复查,开口度3.5 cm, CBCT示冠突符合切除后改变(图1G~1H)。

二、冠突过长的发病情况与病因

1. 发病情况:Izumi等^[3]观察1665例患者的CT,其中冠突过长的发病率为0.3%,其发病年龄从3~78岁均有报道,但20~30岁为多^[4],发生于双侧冠突较多^[2]。其中年轻男性多见,男女发病率为5:1。另外有文献系统回顾了既往的病例报道,结果显示冠突过长发病平均年龄为22.64岁。年龄最小为3个月,最大为66岁。大多数患者(42.6%, $n=49$)年龄在11~20岁,其次是21~30岁(26.1%, $n=30$)。平均发病年龄为14.7岁。79.1%的病例是发生于单侧冠突。大多数病例为特发性(66.1%, $n=76$),其中9.6%的病例与创伤史有关^[5]。增长的冠突向前移位时会引起颞弓表面皮肤的隆突,并引起张口受限^[6]。增生的冠突与颞弓中部和颞骨体部后侧表面机械摩擦,进而导致无痛性张口受限。在观察病例中,冠突过长的患者张口在2~38 mm。一般术前平均开口度为16.5 mm。而在手术中张口都可恢复至10~60 mm(平均36.3 mm),术后随访后的张口度为2~65 mm(平均34.8 mm)^[5]。除了张口受限外,冠突过长可能伴有面部不对称和颞下颌关节紊乱的症状和体征。

2. 病因:目前,冠突过长的病因机制尚不明确。大部分研究认为,颞肌的活动跟冠突过长密切相关。一些颞下颌关节强直的患者可能与冠突过长有关。有研究从颅颌面部的发育的角度推测,当吞

咽运动及下颌运动的减少或缺失时,颞肌活动增加,进而与舌骨上肌和舌骨下肌不平衡,最后促进冠突的增生^[7]。研究发现2例(13%)中枢神经系统疾病引起的咀嚼肌高张力的患者也发生冠突过长^[8]。另一方面,颞肌撕裂后导致肌腱靠近冠突的附着点血肿的形成和随后的血栓组织引起冠突处形成新骨。另外有学者认为,冠突过长可能与创伤有关。面部外伤时,颞肌对冠突的张力引起牵张成骨导致冠突延长^[9]。

有些冠突过长伴随着全身综合征发生的^[10-11]。Wenghoefer等^[8]发现,4例患有强直性脊柱炎的患者并发冠突过长,其中3例HLA-B27阳性,推测冠突增长可能是强直性脊柱炎的早期表现。雅各布氏病(Jacobs disease)是一种罕见的疾病,其特征是下颌冠状突增大与颞弓内侧面形成假关节。雅各布氏病常见于年轻男性,最常见的临床表现是进行性张口受限^[12]。

此外,基因和内分泌因素也可以影响颅面大小和形态特征^[13-14]。肌源性因子(MYF5/MYOD)的缺失也是冠突发育过小或缺陷的原因之一^[15]。生长激素与存在于细胞表面的生长激素受体结合并激活细胞内的信号。生长激素受体基因的变异和突变可引起颅面生长紊乱^[13]。

三、冠突过长的诊断

仅凭临床检查并不能诊断和鉴别冠突过长与其他与张口受限有关的疾病,如颞下颌关节紊乱病

(尤其是不可复性盘前移位)、颞下颌关节强直、未复位的颧骨骨折、放疗引起的咬肌纤维化改变、风湿性关节炎、颞下颌关节肿瘤、鼻咽癌等也会发生张口受限。张口受限最常见于颞下颌关节的不可复性盘前移位,其经常伴随着关节弹响史、关节绞索、疼痛,CBCT检查多伴有关节间隙的改变,髁突骨质的破坏或硬化,但这些症状在冠突过长中并不常见。由于冠突过长的发病率不高,很容易被漏诊或误诊,因此三维CT是诊断冠突过长最有效的手段^[16]。

Kubota等^[17]提出冠突的诊断标准:通过全颌曲面断层片观察颅骨,测量冠突顶-下颌角点与髁突顶点下颌角点距离的比率,比率1.07内为正常,大于或等于1.15则诊断为冠突过长。三维CT既可以直观地看到冠突的形状,又可以看到颧骨与冠突的实际关系。但通过使用这些方法测量时,髁突的长度对比例有很大的影响。异常髁突长度也可能造成诊断结果的偏差。Çorumlu等^[18]以此方法测量安那托利亚人的头颅。但研究指出张口受限的程度取决于冠突与相应的颧弓内表面在frankfort平面上的距离,而不是冠突的增长的长度^[19]。

四、冠突过长的治疗

冠突过长导致的下颌活动度降低,进一步引起狭窄气道、营养不良和生长迟缓、语言发育的负面影响、口腔卫生不良以及肌肉萎缩等问题。因此,由冠突过长引起的张口受限首选是手术治疗^[20]。2010年1月至2020年7月因冠突过长于中山大学附属口腔医院就诊的10例患者,均进行手术治疗,治疗前张口度0.2~2.0 cm,手术切除冠突后张口度可达3.7~4.0 cm。对于发生在儿童及青少年时期的冠突过长,目前大部分观点认为除非严重影响进食及呼吸,其手术时间应该在生长发育期结束后再进行。

冠突过长有效的治疗则是通过从口内或者口外切除过长的冠突^[4]。从口内进行冠突切除可以避免手术瘢痕,减少手术并发症,更利于术后恢复^[21]。我们在口内沿着下颌升支前缘作一纵行切口,暴露冠突后进行切除(图2)。然而,口内进行冠突切除易发生水肿、纤维黏连情况。Robiony等^[22]提出使用内镜辅助下口内切除冠突的治疗方法。内镜辅助下可获得直观清楚的手术视野,使得手术更为简单、快速且安全,并可以最大程度减少组织损伤、减少出血、缩短住院时间等。因此,对比标准的口内切除冠突的方法,内镜辅助下切除更具优势,但仍

需要大量及长期的临床观察。切除下来的冠突还可以用于眶底缺损、牙槽缺损、下颌骨折不愈合、鼻窦增大等颅颌面骨重建外科手术中。在由于冠突过长导致关节强直伴下颌发育不足的病例中,Jafarian等^[23]主张切除冠突的同时,利用切除下来的冠突进行额部的骨移植,矫正患者小下颌畸形外貌。

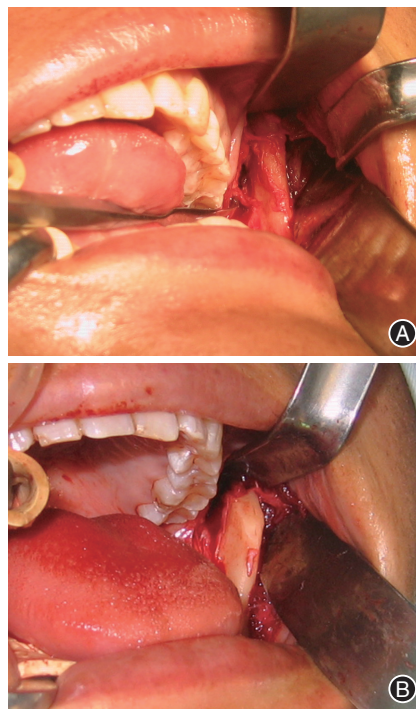


图2 冠突切除术 A:口内切口暴露过长的冠突;B:切除过长的冠突

冠突切开术(gap coronoidotomy)是指冠突与下颌骨升支分离的外科手术。它也是一种被用于治疗冠突过长的方法^[24]。由于颞肌的作用,冠突切开后冠突向上移位,而开口时冠突切开后的下段会被颞骨的颞侧推开而向下移位,因此冠突切开术可有效预防纤维黏连及张口受限的复发^[25]。虽然研究认为,冠突切除术的效果可能比冠突切开术更稳定,但冠突切除会造成更多的组织损伤,导致术后瘢痕增多,最终可能导致张口受限复发。因此,部分学者认为冠突切开术是治疗冠突过长的一种更直接、创伤更小的选择^[26]。与冠突切除术相比,Mulder等^[4]发现冠突切开术的术后张口度的恢复较好。然而,如何选择手术方式仍需要更多的长期的临床观察及研究来进行比较分析。

尽管初期手术可以很大程度的恢复张口度,但有报道显示部分患者会由于纤维强直或冠突再次增长而导致复发^[28]。而术后的物理治疗对早期恢

复张口度及预防复发具有重要意义,且需要尽早进行为期1年的理疗项目。术后1周就可以鼓励患者开始张口及下颌各方向运动的训练,并可使用咬合板、活动功能矫治器、压舌板等辅助训练^[27-28]。术后1年内的张口训练对维持手术效果至关重要。

五、总结与展望

冠突过长是一种表现为无痛性张口受限罕见的疾病,临床上极易与其他与张口受限有关的疾病如颞下颌关节紊乱病(尤其是不可复性盘前移位)、颞下颌关节强直等相混淆。其发病机制尚不明确,主要可能与颞肌的过度激活相关。CBCT是诊断冠突过长最有效的手段。当患者出现张口受限,而无关节弹响、关节绞索、疼痛,且CBCT结果提示冠突高于髁骨或冠突与髁骨水平距离过小,颞下颌关节结构无异常时则应高度怀疑为冠突过长。其治疗手段主要为手术治疗,通过手术切除或截断冠突,同期或延期进行由冠突过长引起颌面部畸形的整复。术后进行物理训练对维持手术效果也十分重要。

利益冲突 所有作者均声明不存在利益冲突

参 考 文 献

- [1] Gómez M, Mejia-Ortega L, Hernández-Andara A, et al. Chronic mandibular hypomobility related to a unilateral accessory condyle. A case report [J]. *Cranio*, 2020; 1-7. DOI: 10.1080/08869634.2020.1788842.
- [2] Ghazizadeh M, Sheikhi M, Salehi MM, et al. Bilateral coronoid hyperplasia causing painless limitation of mandibular movement [J]. *Radiol Case Rep*, 2018, 13(1): 112-117. DOI: 10.1016/j.radcr.2017.11.001.
- [3] Izumi M, Isobe M, Toyama M, et al. Computed tomographic features of bilateral coronoid process hyperplasia with special emphasis on patients without interference between the process and the zygomatic bone [J]. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*, 2005, 99(1): 93-100. DOI: 10.1016/j.tripleo.2004.04.013.
- [4] Mulder CH, Kalaykova SI, Gortzak RA. Coronoid process hyperplasia: a systematic review of the literature from 1995 [J]. *Int J Oral Maxillofac Surg*, 2012, 41(12): 1483-1489. DOI: 10.1016/j.ijom.2012.03.029.
- [5] Goh YC, Tan CC, Lim D. Coronoid hyperplasia: A review [J]. *J Stomatol Oral Maxillofac Surg*, 2020; S2468-7855(19)30305-2. DOI: 10.1016/j.jormas.2019.12.019.
- [6] 江灿洋,黄跃,施斌,等.单侧冠突过长致面部畸形1例报告及文献复习[J]. *中国口腔颌面外科杂志*, 2016, 14(3): 282-284.
- [7] Puche M, Guijarro-Martínez R, Pérez-Herrezuelo G, et al. The hypothetical role of congenital hypotonia in the development of early coronoid hyperplasia [J]. *J Craniomaxillofac Surg*, 2012, 40(6): e155-e158. DOI: 10.1016/j.jcms.2011.08.005.
- [8] Wenghoefer M, Martini M, Allam JP, et al. Hyperplasia of the coronoid process in patients with ankylosing spondylitis (Bechterew disease) [J]. *J Craniofac Surg*, 2008, 19(4): 1114-1118. DOI: 10.1097/SCS.0b013e318176ac3b.
- [9] Bayar GR, Akcam T, Gulsels A, et al. An excessive coronoid hyperplasia with suspected traumatic etiology resulting in mandibular hypomobility [J]. *Cranio*, 2012, 30(2): 144-149. DOI: 10.1179/crm.2012.021.
- [10] Yeom HG. Craniometaphyseal dysplasia: Report of 2 cases with an emphasis on panoramic imaging features [J]. *Imaging Sci Dent*, 2018, 48(4): 283-287. DOI: 10.5624/isd.2018.48.4.283.
- [11] Khadembaschi D, Arvier J, Beech N, et al. Successful management of severe coronoid process hyperplasia in a patient with mucopolysaccharidosis VI: a case report [J]. *J Surg Case Rep*, 2020, 2020(1): rjz388. DOI: 10.1093/jscr/rjz388.
- [12] Sreeramaneni SK, Chakravarthi PS, Prasad LK, et al. Jacob's disease: report of a rare case and literature review [J]. *Int J Oral Maxillofac Surg*, 2011, 40(7): 753-757. DOI: 10.1016/j.ijom.2011.02.011.
- [13] Nakawaki T, Yamaguchi T, Isa M, et al. Growth hormone receptor gene variant and three-dimensional mandibular morphology [J]. *Angle Orthod*, 2017, 87(1): 68-73. DOI: 10.2319/02316-154.1.
- [14] Khandavilli SD, Pattni N, Naredla PR, et al. First case of bilateral coronoid hyperplasia in monozygotic twin sisters - a new aetiological perspective? [J]. *Oral Maxillofac Surg*, 2016, 20(4): 441-443. DOI: 10.1007/s10006-016-0578-x.
- [15] Anthwal N, Peters H, Tucker AS. Species-specific modifications of mandible shape reveal independent mechanisms for growth and initiation of the coronoid [J]. *Evodevo*, 2015, 6: 35. DOI: 10.1186/s13227-015-0030-6.
- [16] Tavassol F, Spalthoff S, Essig H, et al. Elongated coronoid process: CT-based quantitative analysis of the coronoid process and review of literature [J]. *Int J Oral Maxillofac Surg*, 2012, 41(3): 331-338. DOI: 10.1016/j.ijom.2011.10.033.
- [17] Kubota Y, Takenoshita Y, Takamori K, et al. Levandoski panographic analysis in the diagnosis of hyperplasia of the coronoid process [J]. *Br J Oral Maxillofac Surg*, 1999, 37(5): 409-411. DOI: 10.1054/bjom.1999.0159.
- [18] Çorumlu U, Kopuz C, Demir MT, et al. Bilateral elongated mandibular coronoid process in an Anatolian skull [J]. *Anat Cell Biol*, 2016, 49(3): 217-220. DOI: 10.5115/acb.2016.49.3.217.
- [19] Ilguy M, Kursoglu P, Ilguy D. Three cases of elongated mandibular coronoid process with different presentations [J]. *Iran J Radiol*, 2014, 11(1): e4031. DOI: 10.5812/iranjradiol.4031.
- [20] Farronato M, Lucchina AG, Mortellaro C, et al. Bilateral Hyperplasia of the Coronoid Process in Pediatric Patients: What is the Gold Standard for Treatment? [J]. *J Craniofac Surg*, 2019, 30(4): 1058-1063. DOI: 10.1097/SCS.00000000000004768.

- [21] Jonathan RDS, Pereira RDS, Águeda C, et al. Bilateral Coronoid Hyperplasia in a 43-Year-Old Patient Treated With Intraoral Coronoidectomy [J]. J Craniofac Surg, 2017, 28(4): e402-e403. DOI:10.1097/SCS.00000000000003767.
- [22] Robiony M, Casadei M, Costa F. Minimally invasive surgery for coronoid hyperplasia: endoscopically assisted intraoral coronoidectomy [J]. J Craniofac Surg, 2012, 23(6): 1838-1840. DOI:10.1097/SCS.0b013e3182645ebf.
- [23] Jafarian M, Dehghani N. Simultaneous chin onlay bone graft using elongated coronoid in the treatment of temporomandibular joint ankylosis [J]. J Craniofac Surg, 2014, 25(1): e38-e44. DOI: 10.1097/SCS.0b013e3182a2ee26.
- [24] Chen CM, Chen CM, Ho CM, et al. Gap coronoidotomy for management of coronoid process hyperplasia of the mandible [J]. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod, 2011, 112(6): e1-e4. DOI:10.1016/j.tripleo.2011.03.040.
- [25] Gerbino G, Bianchi SD, Bernardi M, et al. Hyperplasia of the mandibular coronoid process: long-term follow-up after coronoidotomy [J]. J Craniomaxillofac Surg, 1997, 25(3): 169-173. DOI:10.1016/S1010-5182(97)80010-8.
- [26] Mohanty S, Kohli S, Dabas J, et al. Fate of the Coronoid Process After Coronoidotomy and Its Effect on the Interincisal Opening: A Clinical and Radiologic Assessment [J]. J Oral Maxillofac Surg, 2017, 75(6): 1263-1273. DOI: 10.1016/j.joms.2017.01.012.
- [27] Galiè M, Consorti G, Tieghi R, et al. Early surgical treatment in unilateral coronoid hyperplasia and facial asymmetry [J]. J Craniofac Surg, 2010, 21(1): 129-133. DOI: 10.1097/SCS.0b013e3181c46a30.
- [28] Ozkaya O, Colak O, Sutcu M, et al. The outcome of coronoidectomy in bilateral coronoid process hyperplasia [J]. Cranio, 2018, 36(1): 53-60. DOI: 10.1080/08869634.2017.1283788.

(收稿日期:2020-07-29)

(本文编辑:王嫚)